

Prof. dr hab. med. Marek Józwiak  
Klinika Ortopedii i Traumatologii Dziecięcej  
Uniwersytetu Medycznego im K. Marcinkowskiego  
w Poznaniu  
ul. 28 Czerwca 1956 r. nr 135/147  
61-544 Poznań

## RECENZJA

**pracy doktorskiej mgr Marty Katarzyny Pawlak pt.: „Ocena aktywności kończyny górnej zajętej podczas czynności oburęcznych u dzieci z mózgowym porażeniem z postacią hemiplegii, poddanych dwom różnym terapiom opartym na połączeniu zmodyfikowanej terapii wymuszonej aktywności ruchowej z intensywnym treningiem bimanualnym (mCIMT-BIT)”**

Problem leczenia chorych po uszkodzeniu tzw. „górnego neuronu ruchowego” w przebiegu zespołu objawów mózgowego porażenia dziecięcego jest zagadnieniem niezwykle ważnym i trudnym, szczególnie wobec faktu oczekiwań poprawy jakości życia tych chorych. Niebagatelnym staje się wobec tego zagadnienie funkcji kończyn górnych w zakresie realizacji zadań codziennych determinujących uczestnictwo dziecka i dorosłego z niepełnosprawnościami. Stąd też dynamiczny i statyczny stan kończyn górnych wynikający z istniejących zaburzeń napięcia mięśniowego, koordynacji ruchowej oraz tzw. „bilansu mięśniowego” wokół stawów, wymaga podejmowania ukierunkowanych działań leczniczych. Najistotniejszym jest jednak określenie wartości klinicznej poszczególnych metod leczenia rehabilitacyjnego oraz skuteczności realizowanych za ich pomocą decyzji terapeutycznych, określenie ich rodzaju i czasu wykonania. Możliwość oceny skutków leczenia daje szansę na przedstawienie jego rzeczywistej wartości terapeutycznej. Tym zagadnieniom, w aspekcie funkcji kończyny górnej poświęciła swoją rozprawę doktorską mgr Marta Katarzyna Pawlak.

Praca liczy 111 stron tekstu zawierającego tabele i ryciny. Streszczenia w języku polskim i angielskim, stanowią początkową część manuskryptu. Tabele zostały umieszczone w tekście. Umieszczenie w tekście rozdziałów tabele i ryciny, szczególnie w części poświęconej wynikom, są starannie wybrane i ułatwiają rozumienie pracy. Podkreślenia

wymaga dokonana selekcja materiału graficznego i brak narażania czytelnika na konieczność analizowania wszystkich uzyskanych podczas opracowywania zagadnienia wyników bez przeprowadzenia wstępnej weryfikacji. Autorka uniknęła również równoczesnego przedstawiania danych w formie tabelarycznej i graficznej. Jest to niewątpliwie przyczyną optymalizacji objętości pracy.

Piśmiennictwo zostało zebrane na 21 stronach i liczy 232 pozycji.

Praca została podzielona na 6 rozdziałów poprzedzonych wykazem zastosowanych skrótów.

We wstępie Autorka omawia podstawy kliniczne i dane etiologiczne oraz epidemiologiczne mózgowego porażenia dziecięcego i następstw wczesnego uszkodzenia „górnego neuronu ruchowego”, jako narastającego problemu klinicznego. Część encyklopedycznych informacji wydaje się być zbędną, tym bardziej, że odwołuje się do bardzo podstawowych, niemalże encyklopedycznych pozycji piśmiennictwa (np. Barker i Yalcin z 2010r). Ciekawym są natomiast rozważania na temat podziału etiologicznego Ferrari i Cionni oraz reorganizacji funkcji neuronalnych w hemiplegii. Zaprezentowanie takiego, etiologicznego rozumienia problemu pozwala Autorce na rzetelne przedstawienie specyficznych problemów kończyny górnej dzieci z hemiplegią (rozdział 1.2.6.). W rozdziale tym wyraźnie przedstawiona jest funkcja „zajętej” kończyny górnej jako asystującej w realizacji zadań manualnych. Wartościowymi są rozważania nt. zjawiska kompensacji kontralateralnej oraz ipsilateralności, warunkujących efektywność leczenia rehabilitacyjnego asymetrycznych zaburzeń funkcjonalnych w hemiplegii.

W kolejnym podrozdziale wstępu podkreśla aspekty postrzegania funkcji manualnych przez pryzmat domeny „uczestnictwa” klasyfikacji ICF. Przedstawiając narzędzia oceny struktury, aktywności i uczestnictwa Autorka przekonuje o zasadności dokonanego wyboru narzędzi badawczych.

Przedstawiając metody leczenia usprawniającego, bezkrytycznie przedstawia strategię rehabilitacji funkcjonalnej obok strategii ukierunkowanych na strukturę wymieniając w jednym ciągu BIT, CIT, robotykę, leczenie spastyczności i leczenie operacyjne. W tym wypadku oczekiwałbym również selektywnego podejścia i zaszeregowania podobnie jak narzędzi klasyfikacyjnych, przedstawionych metod leczenia. Wymienia również metody o udokumentowanej wartości terapeutycznej, takie jak: CIMT, BIT, trening funkcjonalny celowy oraz biofeedback oraz trening siłowy, szeregując je na równi z baklofenem, termoterapią i nieokreśloną fizykoterapią.

W omawianym rozdziale zagadnienia rozwoju funkcjonalnego, patologii funkcji kończyny górnej oraz omówienie metod leczenia rehabilitacyjnego i oceny służącej weryfikacji wyników terapii przedstawione są we właściwych proporcjach. Warty podkreślenia jest fakt przedstawienia i dalszego zastosowania zwalidowanych klinicznie metod oceny, przetłumaczonych i zaadoptowanych do warunków polskich.

W mniejszym stopniu analizowane są zagadnienia zaburzeń napięcia mięśniowego, koordynacji mięśniowej oraz innych przyczyn utraty funkcji, występujących u tych dzieci z hemiplegią.

Obszernie przedstawione zostały zagadnienia klasyfikacji etiologicznej wg Cionni, do której nie ma istotnych odniesień w dalszych częściach pracy. Pomimo tego, z całym przekonaniem uważam, że podrozdział ten jest interesującą dla czytelnika częścią wstępu, a jego brak dalszych powiazań nie wpływa istotnie na utratę wartości merytorycznej pracy.

Do podjęcia tematu pracy naukowej doprowadziła mgr Martę Pawlak ciekawość określona w sformułowanej hipotezie, iż terapia zaburzeń funkcjonalnych kończyny górnej metodą mCIMT – BIT w realizowanej zgodnie z zasadami wersji „Grupy Piraci” jest bardziej skuteczna od pozostałych, w obrazie porównania z grupą kontrolną nazwaną „Grupą Gipsy”. Podrozdział 1.6 dość nieprecyzyjnie używając pojęcia „uzasadnienie” formuje powyższą hipotezę. Ciekawość badawcza Autorki dotyczyła czasu, dawki i częstotliwości stosowania leczenia czyli jednym słowem DAWKI potrzebnej do uzyskania efektu klinicznego rehabilitacji. Jest to niezwykle zbieżne z dążeniami i zainteresowaniami recenzenta, który jest entuzjastą biometrii w diagnostyce funkcjonalnej oraz w zarządzaniu narzędziem terapeutycznym i racjonalnym wykorzystaniu danych klinicznych.

Przyczyna przedstawienia hipotezy badawczej jako „uzasadnienie podjęcia tematu”, może wynikać z braku jej finalnego udowodnienia, co zapewne odbiegało od pierwotnego założonego scenariusza wydarzeń naukowych. Nie umniejsza jednak wartości pracy i wniosków z niej wynikających.

Wobec powyższego celem pracy jest określenie wyższości zmian w zakresie parametrów ilościowej analizy funkcji kończyny górnej u dzieci z postacią hemiplegii mpd, leczonych mCIMT-BIT w obrazie krótkoterminowych obserwacji. Autorka używa jednak słowa „ocena” co niezbyt precyzyjnie oddaje kontekst określenia celów. Konkretnie sprecyzowany cel został podzielony na dwa dalsze, bardziej szczegółowe. Dotyczą one głównie zmian zachodzących w wyniku leczenia i ich uwarunkowań funkcjonalnych i

strukturalnych. W odróżnieniu od celu głównego, sformułowanie celów szczegółowych jest bardzo precyzyjne.

W rozdziale 3. Autorka przedstawia materiał pracy, jego charakterystykę oraz metodykę prowadzonych badań. Badaniami objęła grupę 54 chorych –z równomiernym rozdziałem wg grup terapeutycznych. Kryteria kwalifikacji i dyskwalifikacji do badań określone są w charakterystyce badanych oraz w rycinie 8. (rozdział 3.2), brak ich natomiast we wstępie do rozdziału 3., zawarta jest informacja o zgodzie właściwej komisji etyki badań naukowych; brak jest karty zgody rodzica/opiekuna/pacjenta na prowadzenie badań klinicznych. Stosowane jest dość często określenie grupy pacjentów jako „klienci”. Osobiście uważam to określenie jako niefortunne. Należy zwrócić uwagę, że bez względu na płatnika pokrywającego koszty leczenia dziecko - uczestnik badań jest pacjentem zakwalifikowanym do grupy badawczej. Autorka nie określiła sposobu doboru materiału – randomizowany, konsekwentny czy kohortowy – co w znacznym stopniu ogranicza możliwość recenzji dalszych analiz statystycznych. Nie znam zasad metody kwalifikacji nazwanej „wygodną – convenience”, która została zastosowana. Być może polegała ona na decyzji podejmowanej przez rodziców w trakcie kwalifikacji do świadczonego w formie komercyjnej leczenia. Dokonano podziału na 2 grupy terapeutyczne – „Grupę Piraci” i „Grupę Gipsy”. Wartym podkreślenia jest fakt dłuższego okresu leczenia w grupie „Gipsy”, a co z tym związane większego odstępu czasowego między badaniem początkowym a końcowym w tej grupie dzieci. Kolejną różnicą poza formą unieruchomienia kończyny jest dwukrotnie dłuższy czas BIT w grupie „Gipsy”. Pozostałe cechy obu grup były porównywalne.

Podkreślenia wymaga jednorodność dobranych grup chorych w zakresie stanu funkcjonalnego (GMFCS), czynności manualnych (MACS) i możliwości porozumiewania się. Ma to duże znaczenie w ocenie ograniczonej liczebnie grupy chorych jednorodnych wiekowo. Z drugiej strony należy docenić wysiłek Autorki w zakresie doboru jednorodnych grup dzieci. Podobne podobieństwa dotyczyły klasyfikacji morfologicznych deformacji. Zastanawia, czy konstruując badania na grupie dzieci prezentujących wysoki poziom czynności manualnych – poziom MACS I. obserwowany u 11 osób nie obawiano się wystąpienia tzw. „zjawiska efektu sufitu”? Komentarza wymaga również fakt dużego zróżnicowania w zakresie zaburzeń wzroku obserwowanych u 14 dzieci z grupy „Piracików” i zaledwie 5 w grupie „Gipsy”. Czy istnienie tej wady nie miało wpływu na wybór grupy przez decydujących oraz na uzyskane wyniki?

Narzędzie badawcze wybrane jest rzetelnie i dobrze uzasadnione. Test Small Kids –AHA jest narzędziem zwalidowanym, poddanym tłumaczeniu i polskiej adaptacji kulturowej.

Komentarz dotyczący zróżnicowania czasu wykonania badania po-interwencyjnego zamieściłem powyżej. Zamieszczona interpretacja Klasyfikacji strukturalnej wg Zancolli – nie ocenia selektywności ruchów nadgarstka, a jedynie jego czynną bądź bierną korektywność. Do oceny selektywności ruchów stosuje się całkowicie odmienne metody – najbardziej znana pochodząca z Gillette Childrens Hospital wg Stout.

W rozdziale 3.4. Doktorantka podaje założenia analizy statystycznej. Osobno przedstawia ocenę rozkładów zmiany parametrów oceny funkcjonalnej oraz ich zależności od wieku metrykalnego, płodowego i urodzeniowej masy ciała. Podobnie analizuje zależności od początkowej oceny strukturalnej. Nie jestem ekspertem w zakresie oceny statystycznej, lecz zastosowane narzędzia wydają się być właściwe dla analizowanych próbek. Zwraca uwagę brak określenia minimalnej wielkości próby badanej, co powinno być elementem wstępnym analizy statystycznej oraz brak oceny reprezentatywności grupy.

Rozdział 4. to Wyniki. Najkrótszy ze wszystkich – zaledwie trzy strony uzupełnione czterema czytelnymi rycinami i tabelami. Omawiając wyniki Doktorantka przedstawia początkowo wyniki ogólne – wynik globalny Small Kids-AHA w obu grupach klinicznych, następnie przechodzi do omówienia szczegółowego. Uzyskane zależności wskazują na zależność statystyczną poprawy uzyskanej wewnątrzgrupowo, w obrębie każdej grupy. Nie zaobserwowała różnic międzygrupowych. Podobnie uzyskane wyniki nie pozwoliły udowodnić zależności od stanu wyjściowego w zakresie wieku, masy ciała i klasyfikacji strukturalnych. Tabela 19 – wskazuje na zależności statystyczne, jest omówiona bardzo skromnie, co mogłoby być uzupełnionym. Pojawia się w niej „Grupa Powtórzenie” – wcześniej niewyjaśniona, o którą chodzi?

Rozdział 5. – Dyskusja, w której autorka porównuje własne wyniki z wynikami innych autorów. W ciekawy sposób przedstawia wyniki własne w świetle badań przekrojowych oraz prospektywnych. W pierwszej części skupia się na uzasadnieniu zasadności stosowania terapii mCIMT-BIT w grupie dzieci z hemiplegią w przebiegu mpd. Popiera się publikacjami autorów obecnie najpowszechniej cytowanych, opracowujących te zagadnienia w ośrodkach m.in. australijskich (tutaj uwaga- Leearne Maree Zakrzewski jest kobietą!!! ), holenderskich i innych będących awangardowymi w tym zakresie na świecie. W dalszej części dyskusji poddaje dyskusji dawkę leczenia w zakresie czasu i częstotliwości jego stosowania, podobnie jak poprzednio wykorzystując cenione pozycje literaturowe. Następnie omawia rodzaj unieruchomienia i analizuje wpływ poszczególnych cech i klasyfikacji na wartość uzyskanego wyniku. Dyskusja jest bardzo ciekawą częścią opracowania. Pojawia się w niej analiza wpływu spastyczności na uzyskany wynik, chociaż Doktorantka jakoby spastyczności

wcześniej nie dostrzegała w swoich badaniach – a szkoda. Omawiając zagadnienia obserwowanych zmian w poszczególnych zadaniach testu Small Kids – AHA Autorka skupia się jedynie na omówieniu sukcesów terapii. Wobec powyższego nie poddała dyskusji zaobserwowanego w grupie „Piratów” zjawiska utraty płynności wykonywania zadań angażujących obie ręce. Nie ukrywam, że jest to zagadnienie interesujące, tym bardziej, że nie obserwowane w grupie „Gipsy”. W części dyskusji poświęconej sprawności i wpływu doznań sensorycznych Doktorantka ucieka do przypuszczeń nie całkiem wynikających z uzyskanych wyników.

Dobrze poprowadzona jest dyskusja w zakresie wpływu, albo ich braku, wieku metrykalnego, płodowego i urodzeniowej masy ciała na uzyskane wyniki. Nasuwa się jednak pytanie dlaczego Doktorantka poświęciła dużo miejsca wstępu klasyfikacji etiologicznej wg Cionni i wsp., a w dalszej części opracowania brak prób wykorzystania tej klasyfikacji. Mogłoby to być ciekawym dla uzyskanych wyników.

Omawiając zaobserwowane ujemne korelacje między klasyfikacją strukturalną Zancolli a uzyskanym wynikiem. Wydaje się to oczywistym z punktu widzenia doświadczeń klinicznych. Zjawisko to znajduje również potwierdzenie w literaturze. Doświadczenia własne wskazują również na wpływ deformacji pronacyjnej przedramienia oraz ograniczeń w zakresie czynnej supinacji na prezentowane umiejętności manualne (Szmurlo, Józwiak). Jestem ciekawy opinii Doktorantki na ten temat. Ma to związek z ograniczeniem koordynacji wzrokowo – ruchowej, spotęgowanej deformacją pronacyjną przedramienia. Zagadnienie to nie było przedmiotem przeprowadzonych badań naukowych.

Brakiem dyskusji i całości opracowania jest niezbadanie i nieomówienie wpływu wady wzroku na prezentowaną poprawę obserwowaną po zastosowanym leczeniu. Wada ta występowała u 20 badanych dzieci, tj u prawie połowy badanych.

Bardzo cenną częścią Dyskusji jest omówienie ograniczeń badań. Autorka zalicza do nich: brak grupy kontrolnej; homogeniczny charakter grup; brak dodatkowych narzędzi badawczych oraz brak obserwacji długofalowych. Z pierwszymi dwoma jako czytelnik licznych prac w tym temacie i recenzent niniejszej, nie potrafię się zgodzić. Grupa kontrolna w pracy o charakterze interwencyjnym, ...przed – po ..., nie ma uzasadnienia. Wprowadzenie innej próby testowej, różniącej się dawką bądź częstością interwencji byłoby celowe i wartościowe, lecz grupa kontrolna z brakiem interwencji – nie. Wielkość grupy wydaje się być satysfakcjonująca - niestety brak dowodów statystycznych na to, o czym pisałem wyżej. Homogeniczność grupy jest jej wielką przewagą. Brak innych narzędzi diagnostycznych; brak odległego *follow-up*, jak najbardziej stanowią ograniczenia pracy, zauważone przez Autorkę.

W tym akapicie Dyskusji, swoje apogeum osiągnęła słowotwórczość marketingowa, o której już też wspominałem – pojawił się obok „klientów” także „polski rynek”. W literaturze naukowej tych określeń należy unikać.

W rozdziale 6. Doktorantka przedstawia wnioski. Są one sformułowane w zakresie określonym przez założone cele badań. Wnioski są niestety mało konkretne, rozwlekłe, zawierają liczne powtórzenia z wyników i dyskusji. Jest to absolutnie zbędne. Niestety ich rozległość czyni wrażenie powtarzania wcześniejszych treści, co nie ma miejsca. Sugeruje dalekie zmiany redakcyjne tego rozdziału podczas ewentualnego przygotowywania niniejszego opracowania do publikacji.

Piśmiennictwo zostało dobrane dokładnie i w całości wykorzystane w pracy. Obejmuje ono 232 pozycje naukowych opublikowanych w ostatnich 20 latach w piśmiennictwie anglojęzycznym i polskim. Zaledwie kilka stanowi pozycje podręcznikowe bądź encyklopedyczne, zbędne na tym poziomie naukowym. Ponadto cytowane pozycje obejmują precyzyjnie dobrane prace badawcze oraz poglądy. Przyjęta przez Autorkę forma cytowania poprzez zamieszczanie autorów i roku publikacji znacznie utrudnia czytanie pracy oraz niepotrzebnie zwiększa jej objętość.

Wnioski końcowe. Praca jest bardzo ciekawa i cenna. Z przyjemnością przeczytałem pracę naukową opartą na rzetelnie przeprowadzonych badaniach, wykorzystujących wiarygodne metody diagnostyczne. Zgłoszone powyżej uwagi nie wpływają na ogólną ocenę pracy mgr Marty Katarzyny Pawlak, którą oceniam bardzo pozytywnie. W ocenie tej biorę pod uwagę zaangażowanie autorki w proces rozwiązania szczegółowego, trudnego problemu klinicznego. Podkreślenia wymaga jednak fakt opanowania zasad warsztatu pracy naukowej. Mam nadzieję, że wniesione uwagi i komentarze będą potraktowane jako cenne wskazówki do dyskusji, do dalszego opracowania powyższego materiału do publikacji oraz podczas prowadzenia kolejnych badań naukowych, które Doktorantka deklaruje się prowadzić. Należy podkreślić, że zgodnie z moim przekonaniem wyniki pracy pozwalają prześledzić omawiany problem funkcjonalny, mający duże znaczenie w praktyce klinicznej.

Wykonana praca pozostawia niedosyt. Pierwszym jest jej ograniczenie tylko do wąskiego zakresu badawczego – analizy jednej zmiennej w zakresie dawki i rodzaju unieruchomienia. Drugim jest brak publikacji w piśmiennictwie. Oba można uzupełnić, o co gorąco wnioskuję.

Rozprawa doktorska spełnia warunki określone w art.13 ust.1 ustawy z dnia 14 marca 2003r. o stopniach naukowych i tytule naukowym oraz o stopniach i tytule w zakresie sztuki (t.j. Dz.U. z 2017 r., poz.1789).

W związku z powyższym proszę Radę Naukową Akademii Wychowania Fizycznego w Warszawie o dopuszczenie mgr Marty Katarzyny Pawlak do dalszych etapów przewodu doktorskiego.

Prof. dr hab. med. Marek Józwiak

Adres recenzenta:

Prof. dr hab. med. Marek Józwiak  
Katedra i Klinika Ortopedii i Traumatologii Dziecięcej  
Uniwersytetu Medycznego im. K. Marcinkowskiego  
w Poznaniu.  
ul. 28 Czerwca 1956r. nr 135/147  
61-545 Poznań.  
[jozwiakmp@gmail.com](mailto:jozwiakmp@gmail.com)